상악동 전벽을 침범한 석회화 치성 낭종의 치험례

최보영*, 이준, 김진환, 윤동현, 이영진, 조병호, 유대현
원광대학교 치과대학 구강악안면외과학 교실

Abstract

CALCIFYING ODONTOGENIC CYST ASSOCIATED WITH MAXILLARY SINUS - A CASE REPORT -

Bo-Young Choi*, Jun Lee, Jin Hwan Kim, Dong Hyun Yoon, Young Jin Lee, Byung Ho Jo, Dae Hyun Yoo
Derpartment of Oral & Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Wonkwang University

Calcifying odontogenic cyst(COC) is comparatively rare in occurrence. COC represents about 1% of jaw cysts, and although it may occur in soft tissue, it is most commonly found within bone. Both the intraosseous and extraosseous forms occur with about equal frequency in the maxilla and mandible, mainly in the incisor and canine areas The most notable features of this pathologic entity are histopathological and include a cyst lining demonstrating characteristic ''ghost'' epithelial cells with a propensity to calcify and the occasional association of this finding with certain odontogenic tumors including the odontoma and the ameloblastoma. In this case, COC was associated with anterior wall of the maxillary sinus which appeared in the anterior maxilla of 64-year-old woman, was reported. We report that the clinical experience of COC with review of literatures.

Key words: Calcifying odontogenic cyst(COC), Ghost cell

Ⅰ. 서 론

석회화 치성 낭종 (cacifying odontogenic cyst, COC)은 1962년에 Gorlin 등 다수에 의해 처음 명명된 질환이다.[1] COC는 악골에 발생하는 낭종의 1%를 차지하며 대부분은 악골 내에서 발견되나 몇몇 경우에서는 연조직상에 나타날 수도 있다.[2,3] 또한, COC는 악골 내, 악골 외 형태가 상악과 하악에서 같은 빈도로 발생하며 주로 전치부와 견치부에서 발견된다.[4-7] COC는 대개 무증상이며 우연히 방사선 사진에서 발견될 수 있다.

방사선학적으로 이 병소는 단방성 혹은 다방성으로 잘 경계지어진 방사선 투과성 병소로 작은 양의 불규칙한 석회화 물질이 다양한 크기로 포함될 수 있으며 치아종이나 미맹출 치아와 연관될 수 있다.[2,8-10] COC는 비교적 발생빈도가 낮으며, 대부분 증례에서 인식할 수 있는 특징적인 소견은 조직 병리학적으로 판단할 수 있으며 석회화되는 성향을 가지는 특징적인 유령 상피 세포로 이장된 낭을 포함하고 때때로 치아종과 법랑아세포종을 포함한 치성 종양과 함께 발견되기도 한다.[7-8),11-14)

본 증례에서는 3개월 전부터 상악 전치부 무통성 종창을 주소로 내원한 64세 여자환자의 방사선 사진 상에서는 명확하지 않은 소량의 석회화된 침착물을 포함하고 있으면서 주변치아의 변위를 동반하는 석회화 치성 낭종 1례에 대한 치험을 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

Ⅱ. 증례보고

1. 임상소견

본 64세 여자환자는 약 3개월 전 상악 전방부 종창을 주소로 개인 치과의원에 내원하여 임상 검사 및 방사선 검사 시행한 후 낭성 병소로 잠정 진단 하에 원광대학교 대전 치과병원 구강악안면외과에 의뢰되었으며 내원 당시 상악 전치부 정중에서 약간 우측으로 발생한 종창이 존재하였다. 환자는 종창부위에 대해 압통 및 자발통은 없었으며, 구강위생이 불량한 상태로 구강내 전반적으로 중등도의 치주염

이 이환되어 있는 상태였다. 상악 좌측 중절치는 상실된 상태였으며 상악 우측 중절치 및 측절치 부위의 근심변위 및 2도 가량의 동요도가 존재하였다.

2. 방사선학적 소견

파노라마 사진에서는 우측 상악 중절치에서 우측 상악 제2 소구치 치근단부위까지 연장되어 있는 경계가 명확한 방사선 투과성 병소가 확인되었고 병소 내부에는 소량의 방사선 불투과성 물질이 혼재된 양상을 보였다. 이는 명확하게 석회화 물질로 판단할 정도는 아니었다. 이와 동시에 상악 좌측 측절치와 우측 중절치 사이에 과잉치 혹은 상악 좌측 중절치의 미맹출로 사료되는 치아 유사 물질을 볼 수 있었다 (Fig.1).

컴퓨터 단층 촬영(cone beam CT, dental CT) 상에서는 axial view 및 coronal view 를 볼때 상악 전방부에서 협측으로 피질골의 팽융 및 비박을 보였고, 낭내부에서는 소량의 석회화 침착물을 동반하면서 낭종이 우측 상악동 전벽을 변위시키는 양상이었다. 병소 외방부의 과골성 경계가 관찰되었으나 주변으로의 골파괴 양상을 보이지 않았다. 파노라마 사진에서도 확인할 수 있듯이 낭종 근심 측에 낭종에 포함되어 있지 않는 치아 유사 물질도 확인 할 수 있었으나 본 병소와 관련되어 있지는 않았다 (Fig.2).

3. 치료

앞서 기술한 임상 소견 및 방사선학적 소견상 석회화 치성 낭종을 잠정 진단하였으나 낭내부의 석회화 침착물이 소량인 것으로 보아 확진하기 전까지 일반적인 치근단 낭종을 배제하지 않은 상태로 술전 생검 시행하지 않고 외과적 적출하는 동시에 골 결손 부위에 대한 경골 이식을 계획하였다. 낭종 포함된 상악 우측 중절치, 측절치, 견치, 제1소구치에 대해서는 술전에서도 동요도를 보이고 낭 적출후 잔존된 치조골양 부족하여 보존적인 치료는 시행하지 않고 발치하기로 하였다.

전신 마취하에 열구내 절개 및 수직 이완절개 이용하여 구강내에서 접근하였다. 전층 판막을 거상한 뒤 팽융된 상악골 전방부를 박리한 결과 순측 피질골이 천공된 상태로 잘 경계지어진 낭성 병소가 노출되었고 손상을 방지하기위해 골막기자로 조심스럽게 골막과 낭성 병소를 박리하였다 (Fig.3). 낭종은 상피로 잘 이장되어 있어 비교적 쉽게 박리되었으며 박리를 완료한 후 낭 내벽 확인 시 비강저, 구개부, 상악동 전벽과의 개통은 없었다 (Fig.4).

그리고 상악 우측 중절치, 측절치, 견치, 제1소구치 발치

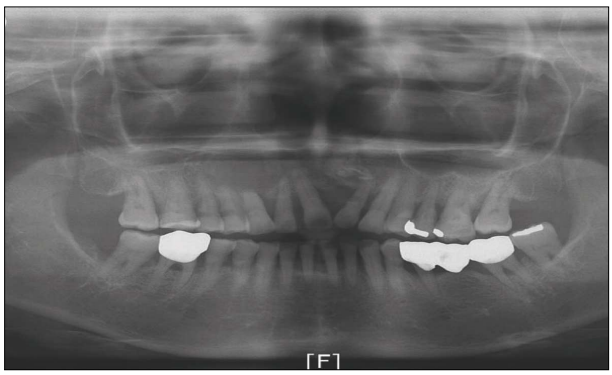

Fig. 1. Preoperative panoramic film shows well-defined unilocular lesions with single foci of radiopaque-like material

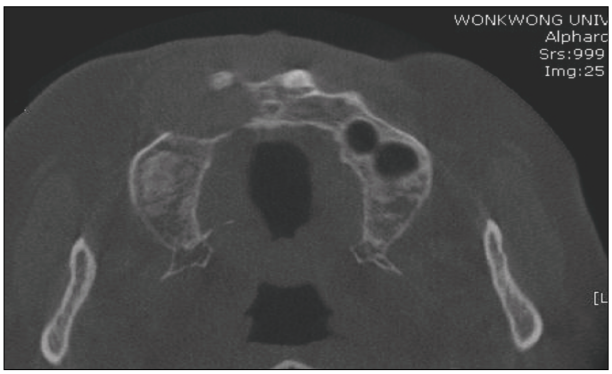

Fig. 2. Axial CT shows unilocular lesion with bony expansion, associated with anterior part of right maxillary sinus

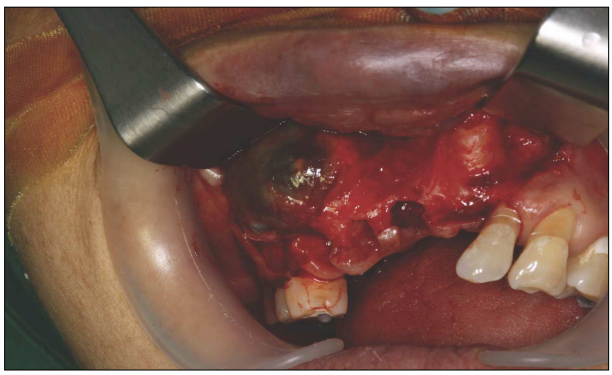

Fig. 3. Intraoperative photograph after dissection between intraoral mucosa and cyst epithelium

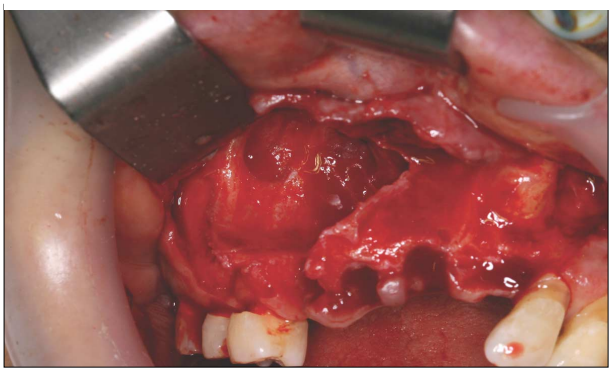

Fig.4. Intraoperative photograph after cyst enucleation

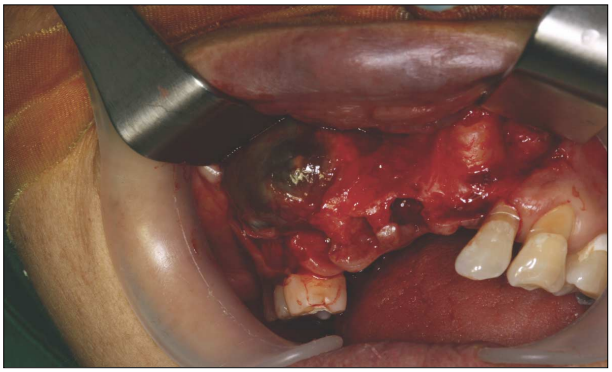

Fig. 5. Intraoperative photograph after autobone graft with tibial cancellous bone and absorbable collagen membrane

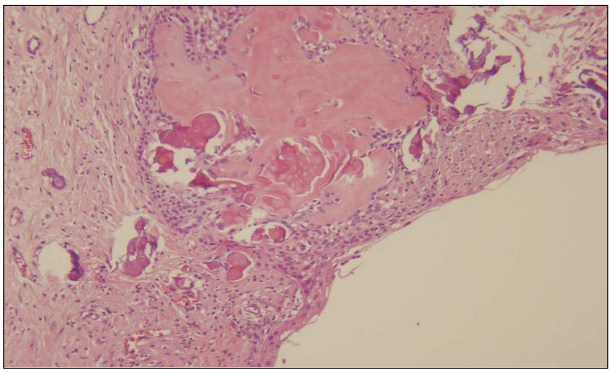

Fig. 7. Photomicrograph showing odontongenic epithelial lining with calcified tissues and ghost cells (hematoxylin and eosin stain, original magnification ×100)

한뒤 좌측 경골두에서 자가골과 인공골 (BioCera™, 오스코텍, 서울, 대한민국-영어 기재 요망) 및 fibrin glue (Greenplast®, 녹십자, 서울, 대한민국-영어 기재 요망)를 혼합하여 낭내부에 이식하였다 (Fig.5). 이후 외벽에는 absorbable collagen membrane (Collatape®, zimmer dental) 적용하였고 장력을 완화하기위해 periosteal releasing incision 시행한 뒤 장력이 없는 것을 확인하고 창상 열개 없이 일차적 봉합하였다 (Fig. 6).

4. 조직병리학 소견

조직학적으로 이 낭성 병소는 성상세망 같은 세포로 구성된 층으로 피개되어 있으며, 이장된 상피 혹은 섬유성 피막 내에 유령상피세포가 나타나는 이장상피 내 잘 경계지어진 기저세포층 및 상피세포와 연관된 calcification이 관찰되었다 (Fig.7).

Ⅲ. 고 찰

COC는 모든 치성 종양의 0.37-2.1%를 구성하는 다소 드문 치성 낭성종양이다.[1,7,15,16] 많은 증례를 통한 후향성 연

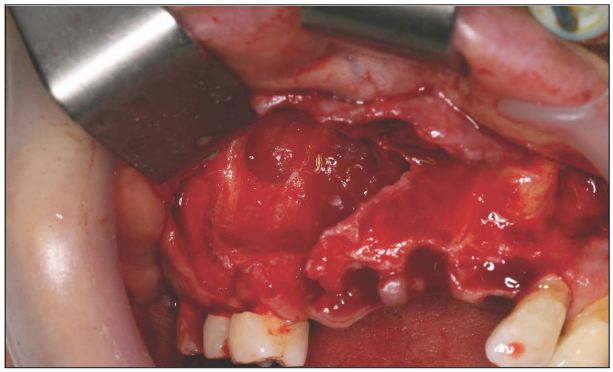

Fig.6. Preoperative panoramic film after cyst enucleation and bone graft

구에서 상악 혹은 하악에 발생하는 빈도가 차이가 없는 것을 보여주었으나 양악골에서 전방부에서 빈번하게 발생하는 경향이 있다.[7,13,17,18] 이 질환은 조직학적으로 ghost cell의 출현과 방사선학적으로 석회화 침착을 특징으로 한다. 낭은 중층 편평상피로 이장되고 상피층 내에서 ghost cell이 출현한다. ghost cell은 난원형의 호산성 과립세포이다. 이 세포들은 이장상피의 기저세포층 밖의 결합조직 내에 노출되어 이물반응으로 육아조직을 형성하고 결국에는 석회화 된다.[25]

COC에서 유령세포의 존재는 본 질환특이성이 아니며 법랑아세포종, 법랑아세포성 섬유종, 법랑아세포성 섬유성치아종, 그리고 치아종에서도 역시 나타날 수 있다.[2] 이러한 치성종양 등은 합병되어 나타나기도 한다. 재발율은 적지만 치성종양이 병발될 경우가 있으므로 반드시 병리학적 생검 확인이 수행되어야 한다. COC는 여러 가지 조직소견을 보이고 임상적 경과도 다양하지만 학자들에 따라서 낭종성 병소로 보거나 종양으로 분류하기도 한다.[25] COC 자체가 비종양성 낭이지만 일부는 낭을 형성하지 않고 실질성으로 상아질성 유령세포종, 상피성 치성유령세포종 또는 유령세포종으로 부르며 침윤성 혹은 악성을 보이는 경우가 있으므로[25] WHO에서는 종양으로 분류하고 있다.[19] COC에 대한 용어와 분류에 대해 일치된 의견은 없지만 일반적으로 Praetorius의 제안이 널리 받아들여지고 있다. 그는 석회화 치성 낭종을 낭성 변이와 신생물성 변이로 나누었으며, 낭성 변이에서는 simple unicystic type, unicystic odontoma-associated type, and unicystic ameloblastomatous proliferating type의 3종류로 분류한다. 그러나 오늘날의 대부분의 증례에서는 unicystic odontoma-associated type으로 분류된다.[8] 본 병소에서는 단방성의 중심성 병소 내에 소량의 석회화물은 존재하였으나 미맹출치는 없었으므로 Praetorius 등의 분류에 의해 석회화 치성낭종의 type Ia로 진단하였다. Toida 등은 COC의 종양성 본태를 나타낼 수 있는 3 가지의 증거를 제시하였다. 첫째, COC중 13~17%는 solid lesion을 나타내는데 이때 ameloblas-

toma 와 같이 상피잔사 내에 microcystic formation을 보이므로 낭종성 변성을 보이는 종양이라고 해석하였다. 둘째, COC는 조직학적으로 치성종양과 유사한 부위를 함유하며 어떤 경우에는 ameloblastoma와 매우 유사한 양상을 보이기도 한다. 셋째, COC의 생물학적 특성상 인접치근의 흡수, 그리고 치밀골의 침식과 중등도의 골파괴 양상을 나타내 양성 치성 종양에 가까운 점이다. 이러한 COC의 종양성 본태를 표현하기 위하여 calcifying odongogenic ghost cell tumor(COGCT), cystic calcifying odontogenic tumor(CCOT), dentinogenic ghost cell tumor(DGCT) 등 여러 가지 명칭이 사용되었으나 Gorlin 등이 명명한 calcifying odontogenic cyst가 일반적으로 사용되고 있다.[20,21]

방사선학적 검사시 방사성 불투과성 물질의 존재는 COC의 감별진단에 도움이 된다. 석회화된 물질이 보일때 선양치성 종양, 석회화 상피 치성 종양, 골화 섬유종 그리고 치아종을 고려해야 한다. 이에 더해 몇몇 상황에서는 병소가 치아종과 연관되어 있을 수도 있고 COC가 치근단에 연관되어 있을 경우 치근 흡수비율이 높다는 흥미로운 보고도 있다.[22] COC는 종종 매복치아 혹은 변위된 인접치아와 관련된다.[17] 따라서 COC는 치근단, 매복치, 치아 변위에 대한 평가를 통해 타질환과 감별이 요구된다. COC는 방사선학적으로 넓은 범위를 가지고 많은 병리학적 상태를 자극시킬 수 있다. 현재 초기 조직병리학적 분석 이전에 방사선학적 판독은 법랑아세포종, 비특이성 치성 종양, 여포성 낭종, 비특이성 치성 낭종, 치아종, 잔존 낭종으로 판단 할 수 있다.[31] Erasmus 등은 CT와 MRI 상에서는 일반 방사선에서 볼수 있는 석회화 침착물 이외의 정확한 진단을 위한 특징적 소견은 볼수 없다고 하였다. 그러므로 석회화 침착물이 calcification이 부족할 경우 방사선학적인 검사 소견으로는 감별진단이 어려울 수 있다.[15]

COC의 치료는 병소의 단순한 적출과 장기간의 추적 관찰이다.[7] 대부분의 증례에서 예후는 좋으나 solid neoplastic COC (dentinogenic ghost cell tumor)의 경우는 재발 경향이 있다. COC는 경우에 따라 공격적이고 재발 성향을 가지기도 하는 양성 치성 신생물로, 특히 dentinogenic ghost cell tumor로 알려진 solid variant가 그러한 성향을 가진다. COC는 현재 다른 치성 종양과 연관되며 치료는 연관된 종양에 근거한다.[7] 다른 치성 병소의 치료에서 조대술을 사용하는 것이 외과적 술식에서는 일반적일지라도 COC에서는 추천되지 않는다.[23] Leandro 외 다수는 COC의 치료로 조대술과 같은 보존적인치료에 대해서는 좀더 많은 증례에 대한 연구가 필요하다고 하였다.[24] 전방부에서 기술한 COC의 낭성 변이에서 추천되는 치료는 대개 보존적인 치료와 예리한 소파기구나 골 삭제 버를 이용한 낭 내벽의 변연 둘레를 1~2mm 정도 제거를 동반 소파술을 동반한 낭적출술이다[3]. 이 술식의 목적은 병소로부터 기원한 잔존 상피들을 제거하는 것이다.[22] 이러한 방법들이 추천될지라도 몇몇 증례들의 재발이 보고되었다.[1,26-29] 대부분의 재발된 증례는 대개 고령환자에서 초기 치료시로부터 5년에 걸쳐 일어난다.[30] 본 증례에서는 보존적으로 예리한 소파기구 및 골 삭제 버로 잔존 상피 포함하여 낭내벽을 최소한 제거하면서 낭적출을 시행하였다. 현재 술후 6개월 경과되었으며 재발 소견을 보이지 않고 있다.

Ⅳ. 결 론

저자 등은 우측 상악동 전방부를 포함하여 상악 전치부의 무통성 종창, 치아 전위를 보이는 64세 여자 환자에서 임상적, 방사선학적 검사시 치근단 낭종으로 잠정 진단한 후에 조직병리학적 검사를 통해 석회화 치성 낭종으로 확진된 증례를 치험하였다. 술후 6개월이 지난 현재 재발의 증상 없이 양호한 치유 및 경과를 보이고 있다. 본 증례에서는 방사선 사진 상에서 석회화 물질의 석회화 정도에 따라 불투과성이 달라지는 경우에 석회화 치성 낭종으로 조기 진단 할 수 없는 상태에서 술전 진단이나 생검없이 낭적출술 및 경골 이식술을 시행하였고 조직병리학적 검사 결과 석회화 치성 낭종으로 진단되었다.

이 증례에서는 방사선학적 검사시 결정적인 진단 기준이 될 수 있는 석회화 물질이 존재하는 경우 석회화 물질의 석회화 정도에 따라 방사선 사진 상에 나타나지 않을 수도 있다는 것을 보여주었다. 또한 방사선 사진상 투과성과 불투과성이 미미하게 혼재하는 경우 석회화 치성 낭종 등 기타 질환의 가능성을 고려하여야 한다.

References

1. Gorlin RJ, Pindborg JJ, Clausen FP *et al* : The calcifying odontogenic cyst-A possible analogue of the cutaneous calcifying epithelioma of Malherbe. An analysis of fifteen cases. Oral Surg 15 : 1235, 1962.
2. Odell EW, Morgan PR : Biopsy Pathology of the Oral Tissues. London, UK, Chapman and Hall Medical, 274,1998
3. Shamaskin RG, Svirsky JA, Kaugards GE : Intraosseous and extraosseous calcifying odontogenic cyst (Gorlin Cyst). J Oral Maxillofac Surg 47 : 562, 1989.
4. Altini M, Ferman AG : The calcifying odontogenic cyst: Eight new cases and review of the literature. Oral Surg Oral Pathol Oral Radiol 40 : 751, 1975.
5. Freedman PD, Lumerman H, Gee JK : Calcifying odontogenic cyst: A review and analysis of seventy cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 40 : 93, 1975.
6. Nagao T, Nakajima T, Fukushima M *et al* : Calcifying odontogenic cyst: A survey of 23 cases in the Japanese literature. J Maxillofac Surg 11 : 174, 1983.
7. Buchner A : The central (intraosseous) calcifying odontogenic cyst: An analysis of 215 cases. J Oral Maxillofac

Surg 49 : 330, 1991.
8. Praetorius F, Hjorting-Hansen E, Gorlin RI *et al* : Calcifying odontogenic cyst: Range, variations and neoplastic potential. Acta Odontol Scand 39 : 227, 1981.
9. Hirshberg A, Kaplan I, Buchner A : Calcifying odontogenic cyst associated with odontoma: A possible separated entity (Odontocalcifying odontogenic cyst). J Oral Maxillofac Surg 52 : 555, 1994.
10. Progrel MA : Treatment of keratocysts: The case for decompression and marsupialization. J Oral Maxillofac Surg 63 : 1667, 2005.
11. Hong SP, Ellis GL, Hartman KS : Calcifying odontogenic cyst. A review of ninety-two cases with reevaluation of their nature as cysts or neoplasmas, the nature of ghost cells and subclassification. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 72 : 56, 1991.
12. Toida M : So-called calcifying odontogenic cyst: review and discussion on the terminology and clasification. J Oral Pathol Med 27 : 49, 1998.
13. Li TJ, Yu SF : Clinicopathologic spectrum of the so-called calcifying odontogenic cysts. A study of 21 itraosseous cases with reconsideration of the terminology and classification. Am J Surg Pathol 27 : 372, 2003.
14. Tajima Y, Sakamoto E, Yamamoto T : Ameloblastoma arising in calcifying odontogenic cyst. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 74 : 776, 1992.
15. Erasmus JH, Thompson IO, van Rensburg LJ *et al* : Central calcifying odontogenic cyst. A review of the literature and the role of advanced imaging techniques. Dentomaxillofac Radiol 27 : 30, 1998.
16. Shear M : Developmental odontogenic cysts. An update. J Oral Pathol Med 23 : 1, 1994.
17. Tanimoto K, Tomita S, Aoyama M *et al* : Radiographic characteristics of the calcifying odontogenic cyst. Int J Oral Maxillofac Surg 17 : 29, 1988.
18. Fregnani ER, Pires FR, Quezada RD *et al* : Calcifying odontogenic cyst: clinicopathological features and immunohistochemical profile of 10 cases. J Oral Pathol Med 32 : 163 2003.
19. Kramer IR, Pindburg JJ, Shear M : The WHO histological typing of odontogenic tumor. Cancer 70 : 2988, 1992.
20. Toida M, Ishimaru JI, Tatematsu N : Calcifying odontogenic cyst associated with compound odontoma. J Oral Maxillofac Surg 48 : 77, 1990.
21. Ryu SH, Chung JJ, Chung JC *et al* : Calcifying odontogenic cyst assocated with unerupted tooth : report of a case. J Kor Oral Maxillofac Recon Surg Vol 15, No. 2, 1993, 페이지 적어주세요
22. Daniels JS : Recurrent calcifying odontogenic cyst involving the maxillary sinus. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 98 : 660, 2004.
23. Tucker WM, Pleasants JE, Maccomb WS : Decom-pressions and secondary enucleation of a mandibular cyst: Report of case. J Oral Surg 30 : 669, 1972.
24. Leandro NS, Ana Cristina R AS, Carolina CG *et al* : Conservative Treatment of Calcifying Odontogenic Cyst: Report of 3 Cases. J Oral Maxillofac Surg 65 : 2353, 2007.
25. Chang-Yun Lim, Sam-Pyo Hong, Jae-Il Lee : Color atlas of oral pathology, second edition, Seoul, Korea medical publishing co. 1999, p.350.
26. Dominguez FV, Espinal EG : The calcifying odontogenic cyst. Clinical and histological analysis of 10 cases. Acta Odontol Latinoam 1 : 77, 1984.
27. McGowan RH, Browne RM : The calcifying odontogenic cyst: A problem of preoperative diagnosis. Br J Oral Surg 20 : 203, 1982.
28. Slootweg PJ, Koole R : Recurrent calcifying odontogenic cyst. J Oral Maxillofac Surg 8 : 143, 1980.
29. Swimson TW : A clinicopathological comparison of the ameloblastoma with calcifying odontogenic cyst. Br J Oral Surg 13 : 217, 1976.
30. Wright BA, Bhardwarj AK, Murphy D : Recurrent calcifying odontogenic cyst. Oral Surg Oral MedOral Pathol 58 : 579, 1984.
31. Seiji Iida, Yasuo Fukuda, Takeshi Ueda *et al* : Osaka, Japan Calcifying odontogenic cyst: Radiologic findings in 11 cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 101 : 356, 2006.

저자 연락처
우편번호 570-711
전라북도 익산시 신용동 344-2 번지
원광대학교 치과대학부속 치과병원 구강악안면외과
최 보 영

원고 접수일 2008년 9월 23일
게재 확정일 2008년 11월 5일

Reprint Requests
Bo-Young Choi
Dept. of OMFS, School of Dentistry Wonkwang Dental Hospital, 344-2 shin yong dong, Iksan Si, Jeonlabuk Do
Tel. 82-63-859-2921 Fax. 82-63-857-4002
E-mail :99byc@hanmail.net

Paper received September 23 2008
Paper accepted November 5 2008